



TITLE:

尿失禁を伴う仙骨形成不全症例に対するS状結腸膀胱拡大術の経験

AUTHOR(S):

藤川, 慶太; 大西, 裕之; 吉村, 直樹; 荒井, 陽一; 橋村, 孝幸; 吉田, 修

CITATION:

藤川, 慶太 ...[et al]. 尿失禁を伴う仙骨形成不全症例に対するS状結腸膀胱拡大術の経験. 泌尿器科紀要 1992, 38(10): 1179-1182

ISSUE DATE:

1992-10

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/117668>

RIGHT:

尿失禁を伴う仙骨形成不全症例に対する S状結腸膀胱拡大術の経験

京都大学医学部泌尿器科学教室（主任：吉田 修教授）

藤川 慶太，大西 裕之，吉村 直樹

荒井 陽一，橋村 孝幸，吉田 修

AN EXPERIENCE WITH AUGMENTATION SIGMOID CYSTOPLASTY FOR URINARY INCONTINENCE CAUSED BY SACRAL AGENESIS: A CASE REPORT

Keita Fujikawa, Hiroyuki Onishi, Naoki Yoshimura,
Yoichi Arai, Takayuki Hashimura and Osamu Yoshida

From the Department of Urology, Faculty of Medicine, Kyoto University

Sacral agenesis is an uncommon disease. About 50 cases have been reported in Japan since 1929. Neurogenic bladder is often accompanied with the disease.

The patient was a 26-year-old man who had suffered from persistent urinary incontinence since his childhood. Kidney-ureter-bladder (KUB) revealed Type IV sacral agenesis according to the classification by Renshaw. The upper urinary tract remained normal. Urodynamics study showed a low compliance bladder with low urethral pressure. Pharmacotherapy failed to improve his continence. Augmentation sigmoidcystoplasty was undertaken to enlarge vesical capacity and it has successfully overcome his urinary incontinence.

Clinical aspects of sacral agenesis are discussed focusing on urological problems.

(Acta Urol. Jpn. 38: 1179-1182, 1992)

Key words: Sacral agenesis, Augmentation enterocystoplasty, Neurogenic bladder

緒 言

仙骨形成不全は稀な疾患であり，欧米で約200例，日本では51例報告されているにすぎない。本疾患は高率に神経因性膀胱を伴う¹⁻³⁾。今回われわれは，低コンプライアンスの萎縮膀胱を伴った仙骨形成不全の症例に対してS状結腸を用いた膀胱拡大術を施行し，尿失禁の改善をみたので報告する。

症 例

患者：26歳，男子大学生

主訴：尿失禁

家族歴：父が糖尿病性腎症・高血圧，祖父が腎不全にて死亡

現病歴：39週，1,780 g で出生。幼少時より尿失禁・便失禁の状態であった。6歳時，内反足に対する術前検査にて仙骨形成不全を初めて指摘された。その後

も尿失禁・便失禁は改善せずオムツでの生活が続いていた。今回，就職を控えて治療を希望し，1991年6月26日当科外来を受診した。

現症：身長 145 cm，体重 78 kg。上半身から大腿部にかけての肥満傾向と比較して下腿部は発育不全。両側内反尖足。外性器・内性器とも特に異常なし。尿意は自覚せず立位にて完全尿失禁状態であるが，臥位にて 100 cc 程度の蓄尿が可能である。肛門括約筋の緊張は弱いが随意的に収縮できる。球海線体反射は陽性。便秘気味だが時に便失禁がある。

入院時検査所見：脂肪肝によると思われる軽度の肝障害がある以外は血液・生化学所見は異常なし。染色体は 46XY。

X線所見：レ線上，L4，L5 と S1 は識別できず，左右腸骨が接しているのが認められた (Fig. 1)。DIPにて上部尿路には特記すべき所見は認めず，膀胱像では膀胱頸部は開大し，壁は不整であった (Fig. 1)。排



Fig. 1. DIP reveals sacral agenesis, and opened bladder neck.

泄性膀胱造影 (VCG) にて左側はⅠ度の VUR が認められたが、残尿は認めなかった。

ウロダイナミクス所見：膀胱内圧測定では仰臥位にて 190 ml 注入時に下腹部膨満感と共にカテーテル周囲より尿漏れがあり、コンプライアンスは 6.3 ml/cmH₂O と低下していた。尿道内圧測定では最大尿道閉鎖圧は 35 cmH₂O と低下していた (Fig. 2A)。

本症例の尿失禁は膀胱の低コンプライアンスと尿道内圧の低下を伴った神経因性膀胱によると診断した。薬物療法として Imipramine, Ephedrin, 抗コリン剤投与にて失禁減少を計ろうとしたが改善はえられなかった。そこで、膀胱容量を増やすために回腸による膀胱拡大術を予定した。なお、膀胱拡大術にても尿失禁が改善しない時は、人工尿道括約筋の設置を予定することにした。

手術所見：下腹部を、正中切開にて腹腔内にはいった。小骨盤腔の狭小化により、小腸はほとんどが上腹部に位置しており、腸管膜の長さが短いため回腸の使

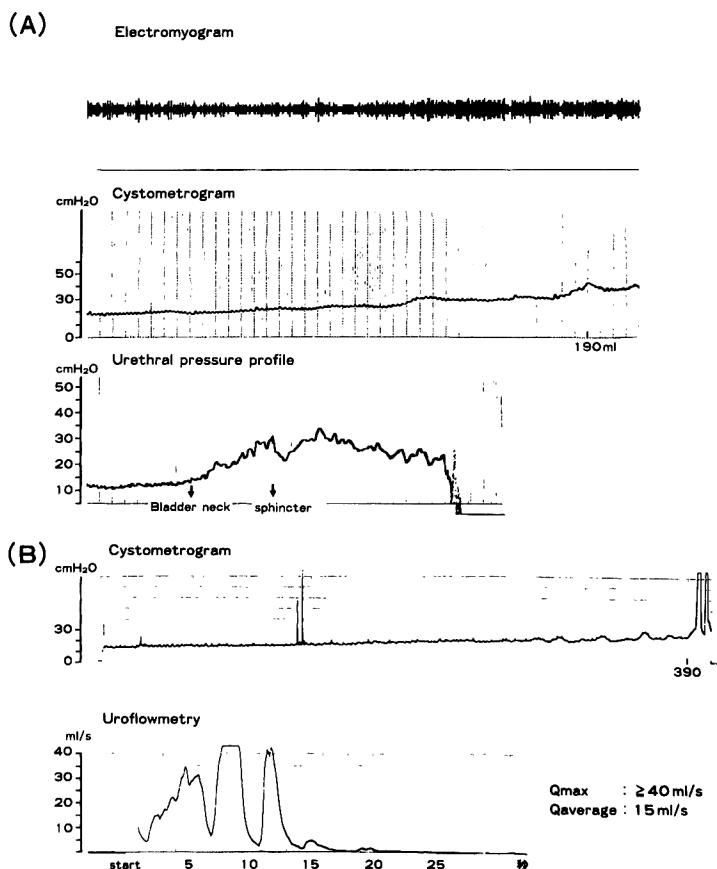


Fig. 2-A. Urodynamics before augmentation cystoplasty B. Cystometry and uroflowmetry 10 weeks after augmentation cystoplasty

用は困難と考えられた。これに対してS状結腸は後腹膜に固定されず長い腸間膜を有していたために、これを用いて膀胱拡大術をおこなうこととした。S状結腸を15 cm遊離し、腸間膜対側に縦切開を加えて detubularization した。これを切開した膀胱にかぶせ 3-0 バイクリル糸にて吻合し、膀胱を拡大した。膀胱瘻および尿道カテーテルを留置して手術を終了した。手術時間は6時間であった。

術後経過: 術後3週目よりクランプ排尿を開始し、術後4週目に膀胱瘻を抜去した。術後10週目の膀胱内圧測定で膀胱容量は390 mlと増大し、コンプライアンスは13 ml/cmH₂Oと改善した (Fig. 2B)。術後14週目で膀胱容量は530 mlと増大し、VURの消失が確認された (Fig. 3)。また尿流測定では最大尿流率は

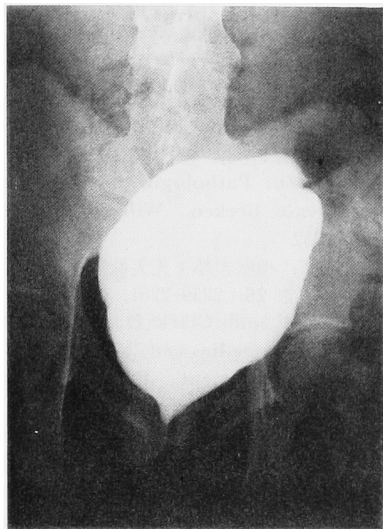


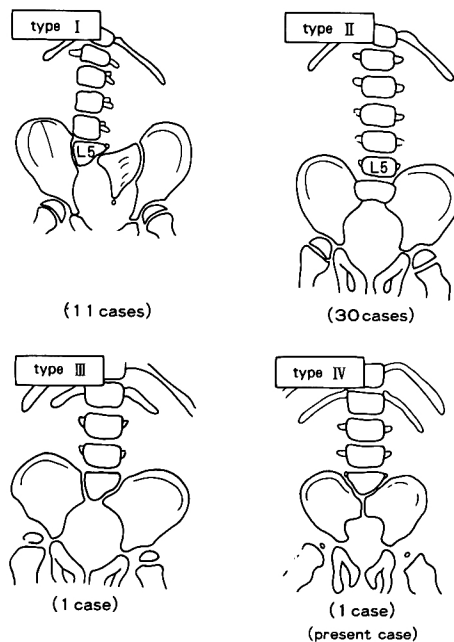
Fig. 3. Cystography 14 weeks after cystoplasty

40 ml/s 以上、平均尿流率は15 cm/sで、良好な排尿状態をえることができた (Fig. 2B)。術後7ヵ月目の現在、尿意の自覚もあり、2~3時間毎の時間排尿で自尿を行い、尿失禁はない。

考 察

仙骨形成不全は欧米では1852年の Hohl ら⁴⁾の報告以来200例以上、日本では1929年の金井・小室⁵⁾の報告以来、自験例を含めて51例が報告されている。発生学的には胎生4~5週頃に何らかの生化学的ストレスがかかることによって生じると考えられている⁶⁾。

Renshaw らは仙骨形成不全を形態学的に4種類に分類している⁷⁾。本邦報告例のうち記載の明らかな43



* No. of cases reported in Japan is shown in parentheses.

Fig. 4. Classification of sacral agenesis (Renshaw et al, 1978⁷⁾)

* No. of cases reported in Japan is shown in parentheses.

例をこれに基づいて分類すると、タイプ I (片側の部分・全欠損) は11例、タイプ II (仙骨の両側の部分・全欠損) は30例、タイプ III (腰仙椎の欠損・腸骨と腰椎が関節面を形成) は1例、タイプ IV (左右腸骨が接する) は自験例のみであった (Fig. 4)。

そこで、本邦報告例について仙骨形成不全の Renshaw 分類と尿路症状、膀胱機能との関連について検討を行った (Table 1)。51例中尿路症状を主訴に来院したものが35例、整形外科的主訴が6例、不明10例であった。尿路症状の内訳を Table 1 に示したが、Renshaw 分類と尿路症状の明らかな関連は認められなかった。また、膀胱機能について記載のあった28例について検討すると、高活動型の症例 (10例) が低活動型 (5例) より多い傾向にあるが、仙骨形成不全のタイプと膀胱機能の間にも明らかな関係は認められなかった。

Renshaw⁷⁾, Guzman⁸⁾ らは運動神経障害のレベルは仙骨欠損の程度に関連すると報告している。しかし膀胱機能に関して、Braren¹⁾, White²⁾, Koff³⁾, Williams⁹⁾ らは、仙骨形成不全の分類と膀胱機能の間には明らかな関係は認められないと報告しており、

Table 1. Urological symptoms and detrusor function in the patients with sacral agenesis according to Renshaw's classification

Type (No. Pts.)	Urinary symptoms				Others and Unreported	Detrusor function			
	Incontinence	Pollakisuria	Dysuria	UTI		Hyper active	Under active	Normal	Unknown
I (11)	4		1	1	5	3		5	3
II (30)	13	6	3	5	3	6	4	8	12
III (1)		1					1		
IV (1)	1					1			
Unknown (8)					8				8
Totals (51)	18	7	4	6	16	10	5	13	23

本邦報告例の検討でも同様な結果であった。

つぎに初診時の年齢で検討してみる。約3分の2の症例では10歳以下で受診しているが、50歳を過ぎて初めて受診する場合¹⁰⁾もあり、occult sacral agenesis の存在も示唆される。従って比較的若年者が尿路症状を主訴に来院した場合、仙骨の形成不全を念頭に置く必要がある。

また本邦では尿路症状を伴う本疾患の多くは保存的療法によって治療されている。治療法について記載があった23例中、保存的療法としては間欠的導尿10例、薬物療法6例、両者の併用3例であった。また外科的処置としては膀胱瘻設置が2例、経尿道的膀胱頸部切除術1例であったが、膀胱拡大術をおこなったものは自験例以外には報告がない。しかし欧米では人工尿道括約筋設置術・尿路変更術⁹⁾、膀胱拡大術^{11,12)}などの報告例が散見され、良好な結果が報告されている。Robert らは、膀胱拡大術の適応を高活動型の神経因性膀胱で薬物療法に反応しないものとしている¹³⁾。

本症に伴う排尿障害の治療を考える場合、レ線学的検査にとらわれることなく、詳細なウロダイナミックス検査にて膀胱機能を評価することが最も重要であり、保存的療法に反応しないものに対しては、膀胱拡大術はきわめて有効な治療法と考えられる。

結 語

症例は26歳男性。尿失禁を主訴とした仙骨形成不全に対して、S状結腸を用いて膀胱拡大術を施行し、尿失禁の改善をみた。本邦報告例について検討してみると、仙骨形成不全のタイプと尿路症状、膀胱機能との間には明らかな関係は認められなかった。本症に伴う尿失禁に対してはウロダイナミックス検査が重要であり、保存的療法に反応しないものには膀胱拡大術が有効であった。

本論文の要旨は第137回日本泌尿器科学会関西地方会にて発表した。

文 献

- 1) Braren V and Jones W: Sacral agenesis: diagnosis, treatment and follow up of urological complications. *J Urol* **121**: 543-544, 1979
- 2) White R and Klauber G: Sacral agenesis: analysis of 22 cases. *Urology* **8**: 521-525, 1976
- 3) Koff S and Deridder P: Patterns of neurogenic bladder dysfunction in sacral agenesis. *J Urol* **118**: 87-89, 1977
- 4) Hohl A: Zur Pathologie des Beckens, Das Shrag-Ovale Becken. Wilhelm Engelmann: 61-63, 1852
- 5) 金井良太郎, 小室吉郎: 先天性仙骨欠損症知見例. 日本医事報誌 **26**: 2259-2261, 1930
- 6) Landaur W and Clark E: Teratogenic interaction of insulin and 2-Deoxy-D-Glucose in chick development. *J Exp Zool* **151**: 245-252, 1962
- 7) Renshaw T: Sacral agenesis: A classification and review of twenty-three cases. *J Bone Joint Surg* **60**: 373-383, 1978
- 8) Guzman L, Khosbin S and Bauer S: Evaluation and management of children with sacral agenesis. *Urology* **22**: 506-510, 1983
- 9) Williams D and Nixon H: Agenesis of the sacrum. *Surg Gynecol Obstet* **105**: 84-88, 1957
- 10) 小林 剛, 当麻嗣裕, 牛山武久, ほか: 仙骨形成不全を伴った神経因性膀胱. 臨泌 **44**: 166-168, 1990
- 11) Servadio G: Neurogenic bladder treated by subtotal cystectomy and ileocystoplasty. *J Urol* **98**: 472-473, 1967
- 12) Gearhart J, Albersten P, F Marshall, et al.: Pediatric applications of augmentation cystoplasty. *J Urol* **136**: 430-432, 1986
- 13) Smith R, Cangh P, Goodwin W, et al.: Augmentation cystoplasty: A critical review. *J Urol* **118**: 35-39, 1977

(Received on April 2, 1992)
(Accepted on May 11, 1992)